

宮城県における口唇裂口蓋裂発生の現況

著者	幸地 省子, 手島 貞一
雑誌名	東北大学歯学雑誌
巻	16
号	1
ページ	70-75
発行年	1997-06
URL	http://hdl.handle.net/10097/31586

原 著

宮城県における口唇裂口蓋裂発生の現況

幸 地 省 子・手 島 貞 一*

東北大学歯学部附属病院顎口腔機能治療部

(部長: 茂木克俊教授)

*仙台赤十字病院

(病院長: 手島貞一)

前東北大学歯学部口腔外科学第二講座

(前主任: 手島貞一名誉教授)

(平成9年4月28日受付, 平成9年5月19日受理)

Incidence and general status of newborns with cleft lip and/or palate in Miyagi Prefecture

Shoko Kochi and Teiichi Teshima*

Clinics for Maxillo-Oral Disorders, Tohoku University Dental Hospital

(Chief: Prof. Katsutoshi Moteki)

*Sendai Red Cross Hospital

(Director: Teiichi Teshima)

Oral and Maxillofacial Surgery II, Tohoku University School of Dentistry

(Former Chief: Prof. Emeritus Teiichi Teshima)

Abstract: We surveyed the incidence of cleft lip and/or palate and the general birth status of newborns with cleft lip and/or palate at 111 obstetrical hospitals and divisions in Miyagi Prefecture between November 1, 1994 and October 31, 1995. Out of 14,707 Japanese births, 26 infants with cleft lip and/or palate were identified. The incidence was 0.177 per 100 live and still births. The incidence per 100 live and still births for each cleft type was as follows: in boys, cleft lip 0.081, cleft lip and palate, and cleft palate 0.067; in girls, cleft lip 0.055, cleft lip and palate, and cleft palate 0.041. No other maxillofacial anomaly was found. There were six newborns with some complications (prevalence rate, 23.1%). There were no differences in general birth status, including variables such as the length of pregnancy and body weight at birth, between our study group and the total infant population.

Key words: cleft lip and/or palate, incidence, Japanese population, length of pregnancy, body weight at birth

緒 言

口唇裂口蓋裂は、先天奇形の中で最も発現頻度が高い¹⁾。これまでに行われた全国的な規模の調査では、口唇裂口蓋裂の発生率は、塚本ら²⁾が 0.205%, 佐藤³⁾が 0.165% と報告している。また、1981 年から 1982 年にかけて、15 都道府県の産科医療施設を対象として実施

された調査⁴⁾では、0.182% であった。

近年、女性の就業率は上昇⁵⁾し、高齢出産化⁶⁾、出生率が低下する⁶⁾一方で、胎児の画像診断が急速に進歩し、先天異常を早期に診断することが可能となった。このような社会環境の変化が、口唇裂口蓋裂等顎顔面奇形の発生数を変化させているか否かは明かではない。

また、口唇裂口蓋裂等顎顔面奇形が認められる児の出生状況に関する詳細な報告もみられない。

この度、宮城県内で発生した口唇裂口蓋裂等顎顔面奇形の発生調査を実施し、発生数、出生状況について若干の知見を得たので報告する。

調査対象と調査方法

日本母性保護産婦人科医会宮城県支部の協力を得て、宮城県内にある産科医療施設を対象として、以下の調査を行った。

調査は、アンケート方式とし、アンケート用紙を111産科医療施設に郵送した。調査内容は、1) 1994年11月1日から1995年10月31日までの1年間の性別日本人総出生児数、2) 同期間に出生した口唇裂口蓋裂等顎顔面奇形が認められた児の出生数、3) 口唇裂口蓋裂等顎顔面奇形が認められた児の出生月、在胎週齢、出生体重、分娩状態、合併症、口唇裂を認めた場合には、その披裂側、の8項目である。調査終了後のアン

ケート用紙を郵送にて回収し、集計した。

結 果

アンケート用紙の回収率は、67.6%であった。この中分娩を扱っている56医療施設での、1994年11月1日から1995年10月31日までの1年間の日本人総出生児数（死産児、流産児は含まれない）は、14,707人であった。性別内訳は、男児7,412人、女児7,295人であった。

この中男児16人、女児10人、合計26人に、口唇裂口蓋裂が認められた（表1）。したがって、口唇裂口蓋裂の発生率は0.177%、口唇裂口蓋裂発生率の95%信頼区間は、0.109～0.245%であった。他の顎顔面奇形の発生はなかった。

裂型別発生頻度は、口唇裂10人、38.5%、口唇口蓋裂8人、30.8%、口蓋裂8人、30.8%であり、発生率は、口唇裂0.068%、口唇口蓋裂0.054%、口蓋裂0.054%であった。また、裂型別発生率を性別にみると、口唇裂は、男児0.081%、女児0.055%、口唇口蓋裂と口蓋裂は、男児0.067%、女児0.041%であり、いずれの裂型でも男女間で差がみられなかった。

口唇裂の披裂側は、左側9人、右側4人、両側3人、不明2人であり、左側が最も多かった。

合併症のある児は、26人中6人、23.1%であり、その内訳は、表2に示した通りであった。裂型別合併症発現率は、口唇裂30.0%、口唇口蓋裂37.5%であり、口蓋裂では合併症のある児はなかった。

在胎週齢別では、在胎37週～41週の正期産が23人、88.5%を占めた（表3）。また、在胎37週未満の早期産が1人（30週）、在胎42週以上の過期産が2人（両児とも42週）であった。

出生体重は1,290～3,766グラムの範囲にあり、平均出生体重は2,896グラム、出生体重2,500グラム以上

表1. 宮城県における出生数、口唇裂口蓋裂発生数の調査結果

	男 (児)	女 (児)	合計 (児)
対象医療施設での日本人総出生数 (1994年11月～1995年10月)	7,412	7,295	14,707
同時期宮城県内総出生数 ⁷⁾			22,660
口唇裂口蓋裂児	16	10	26
口唇(顎)裂	6	4	10
口唇口蓋裂	5	3	8
口蓋裂	5	3	8
発 生 率	0.177%		

他の顎顔面奇形発生はなかった。

表2. 合併症を認めた児の状況

ID	性	裂 型	在胎週齢 (週)	出生体重 (g)	合 併 症
1	女	CL	30	1,290	眼球低形成、欠指症、合指症
2	女	CL	37	1,560	外耳道閉鎖、食道閉鎖、心疾患
3	女	CLP	37	2,148	多発奇形
4	男	CLP	38	2,976	心疾患
5	女	CLP	41	2,704	肛門異所開存
6	男	CL	41	2,762	多指症

表 3. 在胎週齢・出生体重別出生児数

出生体重 (g)	在 胎 週 齢		
	37 週未満	37-41 週	42 週以上
1,500 未満	1 (3.8)		
1,500～2,500 未満		3 (11.5)	
2,500 以上		20 (76.9)	2 (7.7)

児 (%)

が 22 児, 84.6% であった (表 3)。在胎 30 週で出生した児が, 出生体重 1,290 グラムと最も小さく, 眼球低形成, 合指症, 欠指症が合併していた。他に, 低体重児が 3 児であった。この中, 在胎 37 週, 出生体重 1,560 グラムであった児と, 在胎 37 週, 出生体重 2,148 グラムであった児の 2 児に, 合併症が認められた。しかし在胎 39 週, 出生体重 2,470 グラムの児には合併症はなかった。一方, 正期産でしかも出生体重 2,500 グラム以上の 20 児中には, 3 児, 15% に合併症が認められた。42 週で出生した口唇口蓋裂の 2 児には, 合併症はみられなかった。

分娩方法別では, 自然分娩が 16 件と最も多く, 帝王切開 6 件, 吸引分娩 3 件, 鉗子分娩 1 件であった。

生まれ月別では, 9 月が 6 児, ついで 3 月が 4 児, 2 月と 7 月が 3 児, 10 月と 11 月が 2 児, 他の 1 月, 4 月, 5 月, 6 月, 8 月, 12 月がそれぞれ 1 児であった。

考 察

本調査は, 口唇裂口蓋裂等顎顔面に奇形が認められる児の発生数と, その児の出生状況に関して, 宮城県を対象に行ったものである。調査期間 1 年間に, 宮城県内で出生した日本人の総数は 22,660 人⁷⁾であり, これの 64.9% を対象として, この口唇裂口蓋裂の発生調査を行ったことになる。

ほぼ同時期に, 同じ調査が宮城県以外の 17 都道府県で実施された⁸⁾。その集計結果では, 口唇裂口蓋裂のある児 (以下口唇裂口蓋裂児) の発生率は 0.144% であり, 宮城県の発生率 0.177% は, 発生率の高い方に位置していた (表 4)。ちなみに, 最も発生率が高かったのは新潟県の 0.203%, 一方最も発生率が低かったのは佐賀県の 0.067% であった。

初めに述べたように, 口唇裂口蓋裂の発生に関する全国規模の調査は, 1981 年から 1982 年にかけて 15 都道府県を対象に行われており, その時の口唇裂口蓋裂の発生率は, 0.182% であった⁴⁾。全国的には口唇裂口

表 4. 宮城県を含む 18 都道府県における口唇裂口蓋裂の発生⁸⁾

ID	都道府県名	調査対象 (児)	口唇裂口蓋裂児	発生率 (%)
1	北海道	24,545	38	0.155
2	宮城県	14,707	26	0.177
3	新潟県	20,560	36	0.175
4	埼玉県	4,620	5	0.108
5	千葉県	20,688	31	0.150
6	東京都	18,363	35	0.190
7	岐阜県	12,047	10	0.083
8	愛知県	41,462	50	0.121
9	三重県	10,938	15	0.137
10	大阪府	60,400	98	0.162
11	奈良県	2,895	5	0.173
12	兵庫県	6,691	9	0.135
13	島根県	6,337	7	0.110
14	福岡県	21,904	20	0.091
15	佐賀県	4,481	3	0.067
16	大分県	9,970	18	0.181
17	鹿児島県	13,127	15	0.114
18	沖縄県	9,997	16	0.160

表5. 出生1万人あたり口唇裂口蓋裂発生の比較

報告者等	口 唇 裂				口唇口蓋裂				口 蓋 裂				口唇裂口蓋裂合計			
	全体	男児	女児	男女比	全体	男児	女児	男女比	全体	男児	女児	男女比	全体	男児	女児	男女比
本研究	6.8	8.1	5.1	1.50:1	5.4	6.7	4.1	1.63:1	5.4	6.7	4.1	1.63:1	17.7	21.5	13.7	1.57:1
医学部形成外科 ⁹⁾ (1973年～1993年)	6.6	7.0	6.2	1.13:1	5.9	7.1	4.5	1.58:1	4.5	3.5	5.6	0.63:1	17.0	17.6	16.3	1.08:1
1994-1995年全国調査 ^{8)*}	4.5				6.0				3.5				14.0 (14.5)			
1981-1982年全国調査 ^{4)**}	5.2				8.6				3.7				17.5 (18.2)			
赤坂 ¹¹⁾				1.03:1				1.79:1				0.48:1				

* 裂型不明13例を除外して計算した。

** 裂型不明36例が除外されている。

口唇裂口蓋裂合計欄の括弧内の数字は、裂型不明症例を含めた発生率である。

蓋裂の発生率は、この約10年間で明らかに低下した。

宮城県内の口唇裂口蓋裂の発生については、従来から東北大学医学部附属病院形成外科で、宮城県内の体表先天異常の発現調査の一環として行われている⁹⁾。1973年から1993年までの集計によれば、口唇裂口蓋裂の発生率は0.170%であり、多少の変動はみられるものの過去20年間ほぼ同じであった。本調査結果0.177%は、これとほぼ同率である。したがって口唇裂口蓋裂の発生率は、全国的には低下しているものの、宮城県においては変化がない。

裂型別発生頻度は、1994年から1995年にかけての全国調査結果⁸⁾では口唇裂32.1%、口唇口蓋裂43.3%、口蓋裂24.8%、先の東北大学医学部附属病院形成外科による調査⁹⁾では、口唇裂38.8%、口唇口蓋裂34.5%、口蓋裂26.7%であり、本調査結果は両者と差はなかった。裂型別発生率を出生1万人当たりでみると、本調査結果では、口唇裂6.8人、口唇口蓋裂5.4人、口蓋裂5.4人であり、東北大学医学部附属病院形成外科の調査結果⁹⁾である、口唇裂6.6人、口唇口蓋裂5.9人、口蓋裂4.5人と差はなかった(表5)。また1994年から1995年にかけての全国調査結果⁸⁾である口唇裂4.5人、口唇口蓋裂6.0人、口蓋裂3.5人と比較しても裂型別発生率に有意差はなかった(表5)。

ただし1981年から1982年にかけての全国調査結果⁴⁾と、1994年から1995年にかけての全国調査結果⁸⁾とを比較すると、口唇裂と口蓋裂では発生率に差がなかったのに対して、口唇口蓋裂では、前者が出生1万人当たり8.6人、後者は6.0人であり、発生率は有意に低下した。このように最も裂が広範囲にわたる口唇口蓋裂

でのみ発生率が低下した背景には、早期に胎児の画像診断が可能となり、人口妊娠中絶などの処置を受けている可能性が示唆された。

さらに裂型別発生率の男女比をみると、本調査では、口唇裂1.50:1、口唇口蓋裂1.67:1、口蓋裂1.67:1であったが、東北大学医学部附属病院形成外科の1973年から1993年にかけての集計結果⁹⁾では、口唇裂1.13:1、口唇口蓋裂1.58:1、口蓋裂0.63:1であった。この形成外科の集計結果は、赤坂の報告¹⁰⁾と類似しており、本調査結果が若干異なっていると考えられた。

本調査は、宮城県を対象とした1年間の横断調査であるのに対して、東北大学医学部附属病院形成外科で従来から行われてきた宮城県内外体表先天異常発現調査は、20年余りにわたる縦断調査である。しかし、両者間で口唇裂口蓋裂の発生率に差はなかった。そこで本調査の発生率0.177%に基づいて、宮城県内の口唇裂口蓋裂児の出生数を算定したところ、566人に1人の割合で出生しており、1994年11月から1995年10月までの1年間では、宮城県内の口唇裂口蓋裂児の出生数は、95%信頼区間で24.7～52.6児と推定された。

披裂側については、これまでの報告と同じく、左側が最も多く、右側、両側の順に少なくなった。

口唇裂口蓋裂児の出生状況は、正期産の割合が本調査で88.5%、1994年から1995年の全国調査⁸⁾でも90.9%であり、星ら¹¹⁾の全出生を対象とした調査結果89.3%と差がなかった。また2,500グラム以上で出生した児の割合は、本調査では84.6%であり、星ら¹¹⁾の全出生を対象とした調査結果83%とほぼ同率であっ

た。したがって口唇裂口蓋裂があるために、早期産や未熟児あるいは低体重児が多発する現象はなかった。

一般的に在胎 37 週未満、出生体重 1,500 グラム以下の児には、合併症を認めることが多く、外表奇形也多発する¹¹⁾。また、低体重児にも異常の発生頻度が高いといわれている。本調査でも、在胎 37 週未満でしかも出生体重 1,500 グラム未満の児には合併症がみられ、また低体重児でも合併症が多発しており、母集団で一般的にみられる現象と相違がなかった。

裂型別合併症の発現頻度は、これまでの報告では口唇裂で低く、口蓋裂で最も高いとされている。1994 年から 1995 年にかけての全国調査結果⁸⁾でも、口唇裂 17.9%、口唇口蓋裂 25.9%、口蓋裂 31.1% であり、同様の傾向であった。また、東北大学歯学部附属病院顎口腔機能治療部で咬合管理を行っている口唇裂口蓋裂児を対象とした調査¹²⁾でも、合併症の発現は口唇裂で少なく、口蓋裂が多かった。したがって、口唇裂と口蓋裂では 3 割程度に合併症を認めた一方、口蓋裂のある児には合併症がなかったという本調査結果は、今回に特有の現象と考えられた。

結 語

宮城県内における口唇裂口蓋裂の発生を調査し、過

去 20 年間の発生率と差がないことが明かとなった。全国的には、約 10 年前と比較して口唇裂口蓋裂の発生率が低下しており、地域差があることが示唆された。また、全国的には口唇裂口蓋裂の発生率が低下したが、これは口唇口蓋裂の発生率の低下を反映し、その背景には、胎児の早期画像診断が可能となった影響が推察された。口唇裂口蓋裂児の出生状況には、母集団と差がないことが判明した。

謝 辞

本調査にご協力を賜りました日本母性保護産婦人科医会宮城県支部の諸先生に、心からお礼を申し上げます。労をおとりいただきました東北大学医学部産婦人科学講座岡村村博助教授、永井病院院長永井 宏先生に深謝いたします。また、宮城県内の外表奇形発生調査データの使用をご快諾くださいました東北大学医学部附属病院形成外科山田 敦助教授、データをまとめてくださいました神谷昭則先生に感謝申し上げます。本稿の主旨は、第 29 回東北大学歯学会(1996 年 6 月、仙台)において発表した。本調査は、文部省科学研究費補助金総合研究 A「超低出生率時代を迎えた我が国における口唇口蓋裂発現と母体環境要因に関する全国調査」(課題番号 06304042)の分担研究によって行った。

内容要旨：宮城県内の 111 産科医療施設を対象として、1994 年 11 月 1 日から 1995 年 10 月 31 日までの 1 年間に出生した口唇裂口蓋裂等顎顔面奇形が認められた児の発生数と、その出生状況について調査した。日本人出生数 14,707 児中 26 児に口唇裂口蓋裂がみられた。口唇裂口蓋裂の発生率は、0.177% であった。性別裂型別発生率は、男児で口唇裂が 0.081%、口唇口蓋裂と口蓋裂がそれぞれ 0.067%、女児で口唇裂が 0.055%、口唇口蓋裂と口蓋裂がそれぞれ 0.041% であった。他の顎顔面奇形の発生はなかった。合併症が認められたのは 6 児、23.1% であった。在胎週齢、出生体重等出生状況においては、母集団と差がみられなかった。

文 献

- 1) 住吉好雄, 清田明憲, 日原 弘, 横山哲也, 市川 尚, 村瀬 靖, 皆川 進, 坂元正一: 日本母性保護医協会外表奇形等調査の分析—胎児診断の影響—. 平成 4 年度厚生省心身障害研究「発達障害児の早期ケアシステムに関する研究」: 268-274, 1992.
- 2) 塚本重彦, 三谷 茂, 木下正一: 奇形について. 産婦人科の世界 8: 843-853, 1956.
- 3) 佐藤正憲: 我が国の先天奇形に関する統計的研究. 日産婦誌 18: 74-82, 1966.
- 4) 宮崎 正, 小浜源郁, 手島貞一, 大橋 靖, 高橋庄二郎, 道 健一, 持田順治, 河合 幹, 筒井英夫, 下里常弘, 田代英雄, 田縁 昭, 西尾順太郎: 我が国における口唇裂口蓋裂の発生率について. 日口蓋誌 10: 191-195, 1985.
- 5) 総理府統計局: 平成 5 年労働力調査年報, 1994.
- 6) 厚生省大臣官房統計情報部: 平成 6 年人口動態統計, 1995.
- 7) 厚生省大臣官房統計情報部: 人口動態統計速報, 1994 年, 1995 年.

- 8) 河合 幹：文部省科学研究総合研究 A（課題番号 06304042）1994 年から 1995 年にかけて 1 年間に出生した日本人 303,738 人中の口唇・口蓋裂児発生調査。1997.
- 9) 東北大学医学部附属病院形成外科：宮城県内の体表先天異常の発現状況（未発表）。
- 10) 赤坂庸子：唇・顎・口蓋裂の成因に関する統計学的ならびに細胞遺伝学的研究。人遺誌 15：35-96, 1970.
- 11) 星 和彦, 鈴木雅洲, 舟木憲一, 高橋克幸：周産期死亡, 早期新生児死亡および新生児疾患の在胎週別・出産時体重別発生傾向に関する検討。周産期医学 9：1397-1410, 1979.
- 12) 幸地省子：口唇・口蓋裂の哺乳障害と哺乳指導とに関する研究 第 1 報 裂型の違いが哺乳障害に及ぼす影響。小児保健研究 51：605-612, 1992.